



TITLE:

難治性精巣上体炎の病理所見により 確定診断に至った結節性多発動 脈炎の1例

AUTHOR(S):

堀井, 沙也佳; 岩西, 利親; 岸本, 望; 小林, 正雄; 小野,
豊

CITATION:

堀井, 沙也佳 ...[et al]. 難治性精巣上体炎の病理所見により確定診断に至った結節性多発動脈炎の1例. 泌尿器科紀要 2018, 64(12): 515-518

ISSUE DATE:

2018-12-31

URL:

https://doi.org/10.14989/ActaUrolJap_64_12_515

RIGHT:

許諾条件により本文は2020/01/01に公開

難治性精巣上体炎の病理所見により 確定診断に至った結節性多発動脈炎の1例

堀井沙也佳, 岩西 利親, 岸本 望
小林 正雄, 小野 豊
市立東大阪医療センター泌尿器科

A CASE OF POLYARTERITIS NODOSA DIAGNOSED FROM PATHOLOGICAL FINDINGS OF REFRACTORY EPIDIDYMITIS

Sayaka HORII, Toshichika IWANISHI, Nozomu KISHIMOTO,
Masao KOBAYASHI and Yutaka ONO
The Department of Urology, Higashiosaka City Medical Center

A 54-year-old man was admitted to internal medicine due to unidentified fever persisting for 3 months, and was examined. Then, he was referred to our department for suspected pyelonephritis. Although he was initially being treated for pyelonephritis, right epididymitis occurred during the course of treatment. Antibiotics were ineffective, and symptoms such as weakness and subcutaneous nodules also appeared. We performed epididymectomy to differentiate this intractable epididymitis from other systemic diseases. Pathological findings were fibrinoid necrotic vasculitis of middle and small arteries. Of the diagnostic criteria for polyarteritis nodosa, 4 major symptoms and histological findings were satisfied. After we started oral administration of predonin, the fever went down and the creative protein level decreased immediately. (Hinyokika Kiyo 64 : 515-518, 2018 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_64_12_515)

Key words : Epididymitis, Polyarteritis nodosa

緒 言

結節性多発動脈炎 (polyarteritis nodosa : 以下, PAN) は, 中・小型の動脈に壊死性血管炎を認め, かつ細動脈・毛細血管に炎症を認めない疾患と定義される¹⁾. 今回, われわれは精巣上体炎から PAN の診断に至った1例を経験したので報告する.

症 例

患 者 : 54歳, 男性
主 訴 : 発熱・咽頭痛
既往歴 : 扁桃炎
嗜好歴 :
飲酒 毎日焼酎3合
喫煙 20本/日×36年

現病歴 : 来院3カ月前から微熱が出現, 1カ月前から38~40°Cの熱発が持続していた. 近医で抗生剤加療されるも改善なく, 当院総合内科を受診し精査目的に入院となった.

入院時現症 : 身長170 cm, 体重74 kg (3カ月で4 kg 減少), 血圧133/85 mmHg, 体温38.7°C. 全身状態は良好. 身体診察上, 明らかな異常なし.

血液検査所見 : 白血球数・赤血球数・血小板数は正常範囲内で左方移動なく, プロカルシトニンも陰性で

あった. CRP : 10.26 mg/dl, 赤沈1時間値 : 86 mm, 赤沈2時間値 : 117 mm, フェリチン : 2,193.31 ng/ml と炎症反応高値であった. HBV およびその他のウィルスマーカーは陰性であった. 生化学検査は異常なく, 各種腫瘍マーカーも陰性であった.

尿検査所見 : 赤血球1~4/HPF, 白血球1未満/HPF, 細菌(-)

微生物学的検査所見 : 血液培養2セット・尿培養ともに陰性.



Fig. 1. Contrast-enhanced CT revealed thickening of right renal pelvic ureter.

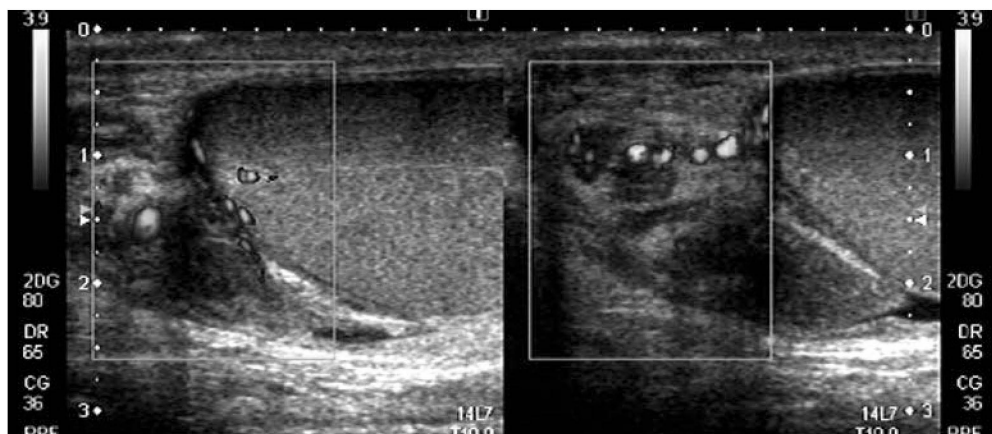


Fig. 2. Color Doppler echo showed swelling of right epididymis and dilation of the testicular vein.

画像検査所見：

頭部 MRI；脳内に明らかな出血や SOL なし，動脈瘤や主幹動脈の閉塞なし。

頸部～腹部造影 CT (Fig. 1)；軽度の咽後膿瘍を疑う低吸収域あり，右腎盂から尿管近位部にかけて軽度の壁肥厚と周囲脂肪組織の混濁あり，その他リンパ節を含め異常なし。

入院後経過：耳鼻科にて診察を行うも有意な所見なく扁桃は感染源としては否定的との診断であった。膠原病や IgG4 関連疾患なども鑑別に挙げたが，右腎盂尿管壁肥厚が有意な所見であるとして，腎盂腎炎としてミノサイクリンによる抗生剤加療が開始され一旦退院となった。

その後，難治性腎盂腎炎および腎盂尿管壁肥厚精査目的にて内科入院日を起点とし，第16病日に当科外来紹介受診となった。

当科受診時の問診で，第7病日頃から右陰嚢に違和

感が出現し悪化傾向であることが判明。触診で右精巣上体に腫大・圧痛があり，エコーでも右精巣上体の腫大および精巣静脈の拡大傾向を認めた (Fig. 2)。CVA 叩打痛は認めなかった。

当科受診後の検査結果：

淋菌・クラミジア PCR；陰性

逆行性腎盂造影 (Fig. 3)；右腎盂尿管壁に不整を認めず，採取した右腎盂尿細胞診も陰性であった。

内科入院以降の経過を示す (Fig. 4)。抗菌薬および抗炎症薬による治療を行うも解熱なく，第20病日頃から手足のしびれ (末梢神経症状)，第30病日頃から脱力 (筋症状)，第70病日頃から上腕の皮下結節 (皮膚症状) も出現した。この時点ではいずれの症状も軽度で，精巣上体炎と関連するものとは想定していなかった。しかし，抗菌薬の効果がないこと，また熱発や CRP と比較して精巣上体の理学所見はそれほど強くないことから，難治性精巣上体炎治療および全身疾患の鑑別目的で第79病日に右精巣上体摘除術を施行した。

術中所見：右精巣上体の腫大はあるも，精巣への炎症波及や自壊を認めなかった。

病理結果 (Fig. 5)：中小動脈周囲にリンパ球および好中球の浸潤と内部にフィブリノイド壊死を認め，フィブリノイド壊死性血管炎の所見であった。

術後経過：精巣上体摘除後も体温・CRP とともに低下しなかった。病理結果および多彩な症状が診断基準に合致することから結節性多発動脈炎の診断となり，第93病日よりプレドニン内服によるステロイド治療を開始したところ，体温・CRP とともに速やかに低下し，8カ月経過した現在も再発を認めていない。

考 察

結節性多発動脈炎 (polyarteritis nodosa : PAN) は，中・小型の動脈に壊死性血管炎を認め，組織像として血管中膜のフィブリノイド壊死像が特徴とされる。厚



Fig. 3. Retrograde pyelography showed no stenosis or irregularity of the right ureter.

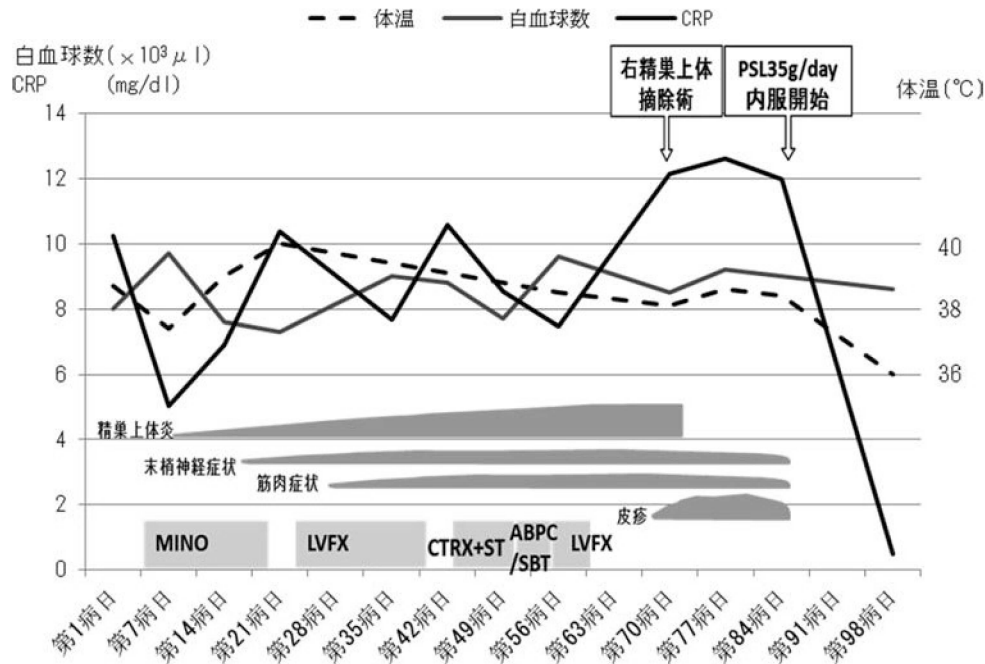


Fig. 4. Clinical course of the patient.

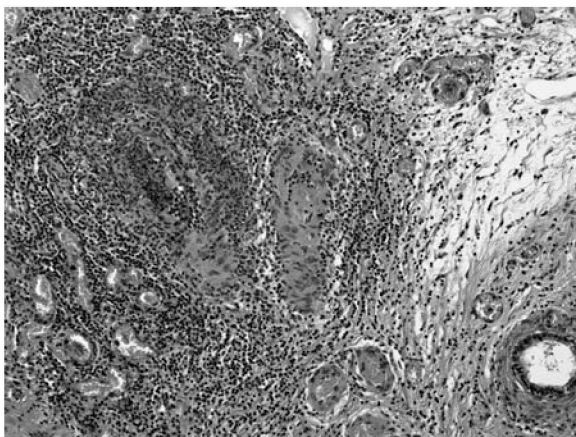


Fig. 5. HE staining indicates fibrinoid necrotizing vasculitis ($\times 100$).

生省特定疾患難病疫学調査研究班の調査では年間新規発症患者数は100万人あたり0.5人、有病率は100万人あたり11.7人と比べて稀な疾患である²⁾。平均年齢51～55歳、男性での発症が多く男女比は1～2:1であった^{3,4)}。

診断には主要症候・組織所見・血管造影所見から成る厚生労働省特定疾患難病血管炎の診断基準が用いられる⁵⁾。主要症候2項目以上と組織所見があれば確定診断となる。

症状は、全身症状と臓器症状に分類され、全身症状は発熱、体重減少、高血圧の3項目から成る。発熱は $38^{\circ}C$ を超えるが急性感染のような悪寒戦慄を伴うことは少ないとされ、60%以上の症例で認められる³⁾。本症例でも高熱が持続しているわりに全身状態は良好であった。体重減少は70%に認め³⁾、発症から診断ま

での期間に左右されるが、診断基準では6カ月で6 kg以上の減少としている⁵⁾。高血圧は糸球体によるレニン・アンギオテンシン系の活性化によって発症し、20%の症例に認められる²⁾。

臓器症状は罹患臓器の炎症および虚血・梗塞によって起こるため、中小動脈の存在する全身の臓器で生じえ、多彩な症状が組み合わさって生じることが多い。このため患者の主訴も多岐にわたることが多く、本疾患の診断を困難なものにしている。比較的起こりやすい臓器症状として、末梢神経炎および神経障害(75%)、筋肉・関節症状(60%)、皮下結節や結節性紅斑などの皮膚症状(50%)、急性腎不全などの腎障害(50%)、消化管出血や穿孔などの消化器症状(40%)が挙げられる²⁾。その他、心症状、睾丸炎、中耳炎、副鼻腔炎や、きわめて稀であるが尿管狭窄も報告されている⁶⁾。本症例において、臓器症状としてはまず扁桃炎が出現し、続いて無症状の腎盂尿管壁肥厚、その後、精巣上体炎、末梢神経障害、筋肉症状、皮膚症状の順で出現した。診断基準のうち主要症候として、発熱と体重減少(診断時までの6カ月間で6 kgの体重減少)・多発性単神経炎・皮下結節・筋力低下の4項目、および精巣上体の組織所見により確定診断となった。なお、ステロイド開始後のCTで腎盂尿管壁肥厚は消失していた。

血液検査所見については診断基準では参考所見に位置づけられているが、多くの症例で白血球増多、貧血、血小板増多およびCRPや赤沈の著明な亢進を認めるとされている。好中球主体に増加することが多いことが感染との鑑別を困難にしていると考えられる。

また、特異的な自己抗体や血清学的所見は存在していない²⁾。

PAN の男性症例のうち 2～18% に精巣症状を認め⁷⁾、剖検では 60～86% に精巣病変を認めたと報告されている⁸⁾。しかし陰囊症状を初発症状とする PAN は稀で診断に難渋することが多い。比較的若年に多いことから精巣腫瘍や精巣上体腫瘍を疑われる症例が多く、約 77% の症例で精巣摘除や精巣上体摘除術が行われていると報告されているが⁹⁾、組織診断は精巣/精巣上体生検で可能である¹⁰⁾。本症例では挙児希望がなかったこともあり、精巣上体摘除術を施行したが、全身症状を伴う難治性の精巣炎や精巣上体炎で PAN を疑うことができれば不要な手術を回避することは可能であったと考える。ただし、稀ではあるが全身症状を伴わない陰囊内の限局型 PAN も報告されていることにも留意する必要がある¹¹⁾。

治療方法はステロイド治療を原則とし、ステロイド抵抗性の場合は免疫抑制剤の投与が行われる²⁾。

予後は発症 3 カ月以内の治療によるところが大きく、適切な治療がなされれば 5 年生存率 80% 程度とされる。しかし再燃率は 40% 程度と高く、長期の経過観察が必要とされる²⁾。本症例は治療開始から 8 カ月経過した現在も再発なく経過良好である。

結 語

難治性精巣上体炎の病理所見により確定診断に至った結節性多発動脈炎の 1 例を経験したので若干の文献的考察を含めて報告した。

文 献

- 1) Jennette JC, Falk RJ, Bacon PA, et al.: 2012 Revised

International Chapel Hill Consensus Conference Nomenclature of Vasculitis. *Arthritis Rheum* **65**: 1–11, 2013

- 2) JCS Joint Working Group: Guideline for management of vasculitis syndrome (JCS 2008). *Circ J* **75**: 490–494, 2011
- 3) Pagnoux C, Seror R, Henegar C, et al.: Clinical features and outcomes in 348 patients with polyarteritis nodosa. *Arthritis Rheum* **62**: 616–626, 2010
- 4) 中林公正: 中・小型血管炎の疫学、予後、QOL に関する小委員会報告。厚生省特定疾患難治性血管炎分科会、平成 10 年度研究報告書、38–48, 1999
- 5) 厚生労働科学研究費補助金難治性疾患克服研究事業: 難治性血管炎に関する調査研究。平成 17 年度総括・分担研究報告書
- 6) Bin Yoo, Hong Kyu Kim, Seung Won Choi, et al.: A case of polyarteritis nodosa with bilateral ureteral obstruction. *Korean J Intern Med* **11**: 165–168, 1996
- 7) Dahl Ev, Baggenstoss AH and De weers JH: Testicular lesions of periarteritis nodosa with special reference to diagnosis. *Am J Med* **28**: 222, 1960
- 8) McCall M and Pennock JW: Periarteritis nodosa: our present knowledge of the disease. *Ann Intern Med* **2**: 628, 1944
- 9) 井上雄一郎, 山下元幸, 執印太郎: 精巣上体腫瘍を形成した限局型結節性多発動脈炎の 1 例。泌尿紀要 **43**: 895–897, 1997
- 10) Mowad JJ, Baldwin BJ and Young JD Jr: Periarteritis nodosa presenting as a mass in testis. *J Urol* **105**: 109, 1971
- 11) Ito M, Sano K, Inaba H, et al.: Localized necrotizing arteritis. *Arch Pathol Lab Med* **115**: 780, 1991

(Received on June 11, 2018)

(Accepted on July 27, 2018)